頬部に発生した結節性筋膜炎の1例と本邦における統計的観察

仁 木 寛・平木紳一郎・松本喜雄・岡野博郎

Nodular fasciitis of the cheek: Report of a case and statistic observation in Japan

Hiroshi NIKI・Shinichiro HIRAKI・Yoshio MATSUMOTO・Hakuro OKANO

Abstract: The nodular fasciitis is a nodular tumor of the reactive fibroblast developed from fascia. Because the tumor increases rapidly in a short period, the adhesion with fascia is rarely observed, and because it reveals a pattern similar to that of a malignant tumor due to the proliferation of fibroblast in the pathohistological pattern, this disease is worthy of note based on its characteristic clinical and pathohistological patterns.

This time, one case was studied and reported as follows. The patient was a 31-year-old woman, who recognized swelling on the right side of the cheek region from approximately 1 month ago, and received medical examination at our hospital due to the increasing swelling. This tumor was extirpated under the general anesthesia. The tumor partially adhered with superficial fascia. The proliferation of irregular fibroblast, erythrocytic emigration of extra-blood vessel, etc. were noted in the pathohistological finding, and she was diagnosed as nodular fasciitis. The progress after extirpation of tumor was favorable, and continued for 3 years and 8 months with no recurrence noted.

Key words: nodular fasciitis, pseudosarcomatous fasciitis, cheek

緒

言

症

例

結節性筋膜炎は筋膜に関係して生じる線維芽細胞の増殖で一種の線維腫症である。1955年 Konwaler ら¹⁾により報告された疾患で、本邦においては1963年今井ら²⁾によって発表されて以来、その特徴的な臨床像および病理組織像により注目されている。本疾患は上下肢や体幹の皮下に好発するが、口腔外科領域では比較的まれな疾患である。

今回、われわれは右側頬部に発現した結節性筋膜炎の症例を経験したので、若干の文献的考察を加えて報告する。

患者：[] 31歳 女性。

初診：昭和56年9月[]。

主訴：右側頬部の腫脹。

既往歴・家族歴：特記事項なし。

現病歴：昭和56年8月中旬より右側頬部に陥凹がみられ、9月初旬より同部が腫脹しはじめ、9月中旬には直径15mmの可動性の腫瘍を触れるようになった。9月[]日に某歯科を受診し、当科を紹介され来院した。

現症

全身所見：特記事項なし。

顔貌所見：右側頬部が陥凹し、皮膚に癒着した直径15mmの弾性軟の腫瘍を触知した(写真1)。皮膚の色に変化はなく、同部に熱感や圧痛もない。また表在リンパ節の異常も認めなかった。

口腔内所見：右側頬粘膜より腫瘍は触知されたが圧痛はない。口腔内では歯その他に異常は認められなかった。

大阪歯科大学口腔外科学教室第2講座

(主任：岡野博郎教授)

The Second Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Osaka Dental University (Chief: Prof. Hakuro Okano)

受付日：昭和60年9月2日

写真 1 初診時顔貌所見
右側頰部に陥凹を認める (矢印)。

写真 2 耳下腺造影所見

臨床検査所見：血液・尿検査では、CRP 陽性以外異常を認めなかった (表 1)。

X線所見：X線的に異常は認められなかった。耳下腺造影検査も行ったが異常はなかった (写真 2)。

臨床診断：悪性腫瘍の疑い。

処置および経過：口腔内より試験切除を行った。病理組織学的検査の結果、束状の線維芽細胞の増殖をみる線維腫との診断を得たので、昭和56年11月■日、全身麻酔下で、口腔外より腫瘍の摘出手術を行った。腫瘍は一部浅在筋膜および皮膚と癒着していたが、周囲組織とは剥離容易で一塊として摘出した。術後の経過は良好で、4日後に退院した。退院後、外来にて経過観察を行っているが、3年8か月経過し、再発の徴候はない。

表 1 初診時臨床検査成績

血液一般検査	
白血球数	6700/mm ³
赤血球数	337×10 ⁴ /mm ³
血色素量	12.2 g/dl
ヘマトクリット	29.2%
血小板数	16.0×10 ⁴ /mm ³
赤沈値 (1 時間値)	34 mm
血液生化学検査	
T.P	7.3 g/dl
GOT	23単位
GPT	22単位
Al-p	2.4 K.KU
BUN	11 mg/dl
血糖値	85 mg/dl
Na	140 mEq/l
K	4.5 mEq/l
Ca	4.6 mEq/l
Cl	103 mEq/l
CRP	(+)

摘出物所見：摘出物の表面は暗赤色で被膜につつまれ弾性軟であり、断面は充実性で灰白色を呈していた。

病理組織学的所見：周囲組織との境界は不明瞭で、筋線維や脂肪織の間にびまん性に浸潤している。紡錘形の線維芽細胞の不規則な束状の増殖を認め、軽度の異型性もあり、分裂像を呈する線維肉腫を疑わせしめるような像を呈する部分もあった。また細胞間が離開し、浮腫状の部分もみられ、赤血球の血管外遊出も認められた (写真 3, 4)。

病理組織学的診断：結節性筋膜炎。

考 察

結節性筋膜炎 (nodular fasciitis) は偽肉腫性筋膜炎 (pseudosarcomatous fasciitis) とも呼ばれ、病理組織像では一見悪性腫瘍のような線維芽細胞性の細胞増殖像を示し、臨床的にも初期には急速な経過をたどることから、悪性腫瘍、特に線維肉腫と誤診するおそれがある。

本疾患は1955年 Konwalder ら¹⁾が報告して以来、上肢、下肢および体幹に多くみられ、おもに皮膚科領域、整形外科領域で報告されてきた。本邦においては1963年今井ら²⁾によって発表されて以来、約 220 例の報告があるが、本疾患の頻度は、岩崎ら³⁾によると約18万例の病理検索より84例 (0.05%) であったと記載されている。口腔外科領域では自験例を含めて17例の報告をみるにすぎない (表 2)。

われわれは1963年以来本邦において発表され、医学中

写真 3 病理組織学的所見 (H-E 染色)

写真 4 病理組織学的所見 (H-E 染色, 高倍)

表 2 本邦における口腔外科領域に発現した結節性筋膜炎の報告例

発表者	発表年	性別	年齢	部 位	主 訴	大 き さ	病 悩 期 間	治 療	再 発 有 無	悪 性 を 疑 った か	外 傷 の 既 往
杉本ら	1977	♂	51	左側顎下部	腫 瘤			摘出		有	
小野ら	1978	♂	65	左側頬部	腫 瘤	32×29×15	17日	摘出	有	有	無
高木ら	1978	♂	26	顎下部	腫脹, 圧痛	24×20		摘出	有		
		♀	22	顎下部	腫 脹	30×30		摘出	無		
		♂	28	顎下部	腫 脹	20×15		摘出	無		
		♀	46	硬, 収口蓋境界部	腫 脹	10×10		摘出	無		
		♂	34	舌	腫 脹	10×10		摘出	無		
梁川ら	1980	♂	31	右側頬部	腫 瘤	32×22		摘出	無	有	
工藤ら	1981	♂	14	左側下顎角部	腫 瘤	25×20×20	1 か月	摘出	無	無	無
平田ら	1981	♂	51	左側顎下部	腫 瘤	拇指頭大	7 日	摘出	無	無	無
		♀	30	左側下顎角部	腫 瘤	50×32	1 か月	摘出	有	有	無
藤平ら	1981	♀	48	右側口角	腫 瘤	φ 10 mm	10日	摘出	有	無	無
堀口ら	1981	♂	29	鼻根部	結節性腫瘤	小指頭大	1 か月	摘出	有	有	
今村ら	1982	♂	25	左側頬部	腫 瘤	25×20×20	最近	摘出		無	無
谷口ら	1983	♂	23	右側頬骨部	腫 瘤	うずら卵大	1 か月	摘出	有	有	
高野ら	1984	♂	2	左側顎下部	腫 脹	小鶏卵大		摘出	無	有	無
自験例		♀	31	右側頬部	腫 脹	φ 15 mm	1 か月	摘出	無	有	無

表 3 本邦における結節性筋膜炎の年齢および性

	症 例 数	%
性 男 性	130	58.6
女 性	92	41.4
年 齢 0- 9	9	4.1
10- 19	16	7.3
20- 29	38	17.4
30- 39	51	23.4
40- 49	55	25.2
50- 59	29	13.3
60- 69	19	8.7
70- 79	1	0.5

表 4 本邦における結節性筋膜炎の発生部位

	症 例 数	%
上肢	107	48.4
上腕	18	8.1
前腕	89	40.3
下肢	49	22.2
大腿	35	15.8
下腿	14	6.3
体幹	34	15.4
頭頸部	31	14.0

表 5 本邦における結節性筋膜炎の主訴

	症 例 数	%
腫 瘤 (結節を含む)	202	91.0
腫 脹	10	4.5
硬 結	9	4.1
浮 腫	1	0.5
疼 痛 (圧痛または自発痛)	62	27.9

表 6 本邦における結節性筋膜炎の大きさ

	症 例 数	%
小 豆 大	2	2.5
大 豆 大	11	13.8
小 指 大	8	10.0
示 指 頭 大	9	11.3
拇 指 頭 大	28	35.0
鳩 卵 大	10	12.5
鸛 卵 大	2	2.5
鶏 卵 大	5	6.3
小児手拳大	4	5.0
手 拳 大	1	1.3

表 7 本邦における結節性筋膜炎の病愴期間

	症 例 数	%
1 週間以内	58	29.7
2 週間以内	77	39.5
3 週間以内	6	3.1
1 か月以内	21	10.8
2 か月以内	9	4.6
3 か月以内	8	4.1
6 か月以内	8	4.1
6 か月以上	8	4.1

表 8 本邦における結節性筋膜炎の再発症例

	症 例 数	%
再発症例 (+)	14	10.4
再発症例 (-)	121	89.6

表 9 本邦における結節性筋膜炎の外傷既往症例

	症 例 数	%
外傷既往症例 (+)	5	2.7
外傷既往症例 (-)	180	97.3

央雑誌に収録されている報告例を文献的に考察した。

1. 年齢および性 (表3)

発病年齢は40歳代55例 (25.2%), 30歳代51例 (23.4%) で、30歳代40歳代で全体の約半数を占め、性別は男性130例、女性92例で、やや男性に多い傾向が認められた。

2. 発生部位 (表4)

発生部位をみると上肢107例 (48.4%), 下肢49例 (22.2%), 体幹34例 (15.4%), 頭頸部31例 (14.0%) で、口腔外科領域では17例 (7.7%) であった。上肢特に前腕部に発生頻度が高かった。

3. 主 訴 (表5)

主訴においては腫瘤 (結節を含む) が202例で全症例の91.0%を占めていた。全症例中、圧痛または自発痛を有するものは62例で27.9%に疼痛が認められた。

4. 初診時の大きさ (表6)

初診時の大きさの記載のあった症例では、小豆大から手拳大までの大きさが認められ、拇指頭大が28例で35.0%を占めていた。

5. 自覚より初診までの期間 (表7)

病愴期間は1週間以内が58例 (29.7%), 2週間以内が77例 (39.5%) であった。長期の例では自覚より数 years 経過例が1例みられたが、ほとんどの症例が早期に受診

していた。

6. 再発症例 (表8)

再発の有無の記載があったのは135例で、そのうち14例 (10.4%) に再発を認めた。121例 (89.6%) において再発は認められなかった。

7. 外傷の既往 (表9)

本疾患の発生部位に外傷の既往がはっきりしている症例は5例 (2.7%) に認めた。

本症の臨床的特徴は、好発年齢層が30歳代40歳代にピークを持ち、男性にやや多い傾向がある。一般に単発性で、前腕に好発する。口腔領域では、口腔周囲の筋膜に発生して皮下腫瘤として生ずるものと粘膜下に発生するものがある⁵⁾。大きさは拇指頭大のものが多く、主訴として結節、腫瘍を訴えて来院するものが多い。圧痛、自発痛を認めるものは約25%の症例に認められた。病愴期間は2週間以内に約70%の症例が受診しており、発症から診断、治療までの経過が短いのが特徴で⁵⁾、腫瘍が急速に増大するために受診も早期である。

本疾患は線維肉腫の分化型のものと最も類似する病変で悪性疾患と誤診される可能性があり、鑑別診断に注意を要する。岩崎ら³⁾は臨床事項として (1) 1~2週間急速に増大する単発性皮下結節で大きさは小指頭大から拇指頭大、(2) 前腕、大腿、上腕、胸壁に好発、(3) 軽

度の自発痛または圧痛を伴うことが多い。(4) 30~50歳代に多発,(5)手術時結節は筋膜と密接に関係している。病理学的事項として、肉眼所見では(1)大きさ最大径1~2cmの結節性病変で被膜を欠く。組織学的所見では(1)粘液腫様基質を背景として線維芽細胞の無方向性の増殖(組織培養形態ないし羽毛状形態),(2)新生毛細血管の放射状配列と赤血球の血管外遊出,(3)少数の正常核分裂像,(4)軽度の炎症性細胞浸潤,(5)高齢者では神経節細胞様巨細胞が出現することがある。以上の11項目を診断の要点としてあげている。

本疾患の治療は一般に外科的切除が行われているが、線維肉腫などの悪性腫瘍と診断され大きな手術を受けたり、放射線照射をされた症例もある。予後は良好で、再発を認められた症例も腫瘍の取り残しによるものと考えられる。しかし、高木ら⁵⁾によると取り残しがあっても自然消失して再手術を必要としない例もあると述べられている。また阿曾ら¹¹⁾は生検後、急速に消失した症例もあると報告している。しかし田中ら¹²⁾による本疾患が悪性化したという症例の報告もある。

結 語

31歳、女性の右側頬部に発生した結節性筋膜炎の1症例を経験したので報告した。本疾患は悪性腫瘍と誤診され、過剰な外科的手術を受けることがあるため、口腔外科領域でも本疾患の存在を認識し、対処することが必要であると考えた。

引用文献

- 1) Konwaler, B.E., Keasbey, L., et al.: Subcutaneous pseudosarcomatous fibromatosis (fasciitis). *Am J Clin Path* 25: 241-252 1955.
- 2) 今井 環, 唐仁原 誠: 肉腫様筋膜炎(Pseudosarcomatous Fasciitis)について。臨床と研究 40: 952-955 1963.
- 3) 岩崎 宏, 遠城寺宗知: 結節性筋膜炎(Nodular Fasciitis)の臨床病理学的観察。癌の臨床 18: 793-800 1972.
- 4) 小野芳男, 伝法谷千寿子, 他: 頬部に発生した Nodular fasciitis の1症例。日口外誌 25:414-418 1979.
- 5) 高木 実, 迫田由紀子, 他: 口腔領域の結節性筋膜炎。口病誌 45: 121-126 1978.
- 6) 工藤逸郎, 田中 博, 他: 下顎角下部に生じた結節性筋膜炎の1例。日大歯学 55: 177-182 1981.
- 7) 平田賢三, 村上 謙, 他: 頸部に発生した結節性筋膜炎の2症例について。耳鼻臨床 74: 増4: 2173-2177 1981.
- 8) 藤平正利, 渡辺千鶴子: 顔面に生じた結節性筋膜炎の1例。日皮会誌 91: 778 1981
- 9) 今村光俊, 中村 繁, 他: 頬部に発生した結節性筋膜炎の1例。日口外誌 28: 324 1982.
- 10) 高野伸夫, 中野洋子, 他: 小児の顎下部にみられた結節性筋膜炎(nodular fasciitis)の1例。日口外誌 30: 371 1984.
- 11) 阿曾三樹, 島雄周平: 生検後急速に消失した nodular fasciitis. 西日皮膚 41: 589 1979.
- 12) 田中博子, 尹 榮淑, 他: Pseudosarcomatous fasciitis の悪性化と思われる1例。日整形外科誌 43: 265 1969.